Title: Symptomatic unruptured pediatric intracranial aneurysm poses a Diagnostic and management dilemma.

Dr. Moufid Mahfoud*

(Received 2 / 11 / 2022. Accepted 21 / 12 / 2022)

□ ABSTRACT □

Intracranial aneurysms are rare in the pediatric population and constitute less than 2% of all cerebral aneurysms. Relative to their adult counterparts, published series have been few. The proportion of ruptured aneurysms in patients younger than 15 years is less than 1%.
The occurrence of aneurysms is probably the result of an interplay between congenital factors and hemodynamic stress.
Our case is a 10-year-old boy suddenly presented to the emergency department complained of severe headache, diplopia and partial ptosis.
There was no history of systemic upset, trauma or relevant medical or surgical history.
Urgent brain CT scan and Brain MRI were performed with normal findings.
The patient was admitted to pediatric ICU for ICP monitoring.
Standard clinical examination and laboratory investigations were done to exclude intracranial infection, toxins and metabolic conditions.
Enhanced CT angiography revealed a 5 mm saccular ICA bifurcation aneurysm on the left side.
Detailed screening and imaging were done to rule out any associated conditions, such as Autosomal dominant polycystic kidney disease (ADPKD), fibro muscular dysplasia, coarctation of aorta, Ehlers syndrome, and Marfans syndrome.
A multi-disciplinary team (MDT) meeting had been held and surgery was recommended after interdisciplinary decision with radiologist and two neurosurgeons.
The patient underwent microsurgical clip ligation of ICA bifurcation aneurysm after 10 days of symptoms. The patient was discharged on day 7 after operation.
Post-procedure CTA showed complete exclusion of the aneurysm from the circulation.
Conclusion
Diagnosis of symptomatic unruptured intracranial aneurysm is challenging. The next challenge is to determine which aneurysms pose a significant risk for future rupture.
The management of pediatric intracranial aneurysms is controversial. A multidisciplinary team is best able to treat such complex conditions.

Key Words: unruptured aneurysm, pediatric intracranial aneurysm, Surgical clipping

*Assistant professor, Department of surgery, Faculty of medicine, Tishreen university, Lattakia, Syria

تدبير أم الدم الدماغية غير المتمزقة العرضية عند الأطفال

د. مفيد محفوض*

(تاريخ الإيداع 2 / 11 / 2022. قُبِل للنشر في 21 / 12 / 2022)

□ ملخّص □

أم الدم الدماغية نادرة الحدوث في الأطفال وتشكل أقل من 2 ٪ من جميع أمهات الدم الدماغية. بالنسبة إلى نظرائهم البالغين.

نسبة أمهات الدم الدماغية المتمزقة في المرضى الذين تقل أعمارهم عن 15 سنة أقل من 1٪.

من المحتمل أن يكون حدوث أمهات الدم الدماغية نتيجة للتفاعل بين العوامل الخلقية والآلية الهيموديناميكية

حالتنا هي طفل يبلغ من العمر 10 سنوات قدم فجأة إلى قسم الطوارئ يشكو من صداع شديد وشفع وتدلي جزئي لجفن العين.

لم يكن هناك تاريخ من الاضطرابات الجهازية أو الصدمات أو التاريخ الطبي أو الجراحي ذي الصلة.

تم إجراء فحص عاجل للأشعة المقطعية والدماغ بالرنين المغناطيسي مع نتائج طبيعية.

تم إدخال المريض إلى وحدة العناية المركزة للأطفال لمراقبة ارتفاع التوتر داخل القحف.

تم إجراء الفحوصات السريرية والفحوصات المخبرية القياسية لاستبعاد الإنتان الدماغي والسموم والأمراض الاستقلابية.

كشف تصوير الأوعية المقطعي المحوسب عن أم دم دماغية على تفرع ICA بحجم 5 مم على الجانب الأيسر.

تم إجراء فحص تفصيلي وتصوير لاستبعاد أي حالات مرتبطة، مثل مرض الكلى المتعدد الكيسات السائد ((ADPKD، وخلل التنسج العضلي الليفي، وتضيق الأبهر، ومتلازمة إهلرز، ومتلازمة مارفانس.

تم عقد اجتماع لفريق متعدد التخصصات ((MDTوأوصى بإجراء الجراحة بعد قرار متعدد التخصصات مع أخصائي الأشعة واثنين من جراحي الأعصاب).

خضع المريض لعملية ربط مشبك بالجراحة المجهرية لأم الدم الدماغية بالتفرع ICA بعد 10 أيام من الأعراض. خرج المريض في اليوم السابع بعد العملية.

أظهر CTA بعد الإجراء اختفاء أم الدم من فروع مسبع ويلس.

يعد تشخيص أم الدم الدماغية غير المتمزقة المصحوبة بأعراض أمرًا صعبًا. يتمثل التحدي التالي في تحديد أي أمهات الدم التي تشكل خطرًا كبيرًا على حدوث تمزق في المستقبل.

إن تدبير أمهات الدم الدماغية عند الأطفال أمر مثير للجدل. الفريق متعدد التخصصات هو الأفضل في علاج مثل هذه الحالات المعقدة.

الكلمات المفتاحية: أم الدم غير المتمزقة، أم دم دماغية لدى الأطفال، الربط المشبكي الجراحي

* **مدرس – قسم الجراحة – كلية الطب – جامعة تشرين _اللاذقية– سورية**

مقدمة:

أمهات الدم الدماغية نادرة الحدوث في الأطفال وتشكل أقل من 2 ٪ من جميع أمهات الدم الدماغية [1، 2، 3]. بالنسبة إلى نظرائهم البالغين، كانت السلسلة المنشورة قليلة، وكان عدد الحالات التي تمت مراجعتها لكل سلسلة صغيرًا. يختلف التوزيع العمري بين الجنسين حيث يظهر الأولاد زيادة تدريجية في التكرار مع تقدم العمر، بينما تسود الفتيات في فترة البلوغ. [4]

أكثر الأعراض شيوعًا لشكوى أمهات الدم في الأطفال هو النزف تحت العنكبوت SAH، حيث يمثل أكثر من 70 ٪ من الحالات. تشمل العروض التقديمية الأخرى النوبات الاختلاجية والصداع المزمن وكنتائج عرضية على المسح الدماغي. [4]

غالبًا ما تظل أمهات الدم الدماغية غير المتمزقة بدون أعراض (خاصةً تلك التي تقل عن 10 مم) أو يمكن أن تظهر مع أعراض بما في ذلك الصداع، والنوبة، وشلل العصب القحفي، والعجز العصبي البؤري، والأحداث الدماغية البعيدة عن موقع أم الدم بسبب الصمات الناشئة من كيس تمدد الأوعية الدموية. [5] نسبة أمهات الدم الدماغية المتمزقة في المرضى الذين تقل أعمارهم عن 15 عامًا أقل من 1٪ [6]. تمزق تمدد الأوعية الدموية في الأطفال هو سبب لنزيف تحت العنكبوتية في 18–52.1٪ [7،8]، وقد تم الإبلاغ عن العديد من العمليات الناجحة [8].

يتفق معظم المؤلفين على أن تشعب ICA هو الموقع الرئيسي لتمدد الأوعية الدموية عند الأطفال بمعدل 24 إلى 50٪ [6، 9، 10، 1 1]. يُحسب هذا الموقع في البالغين بنسبة 2٪ تقريبًا. كان الموقع الرئيسي على الشريان الدماغي الأوسط ((MCAهو الجزء البعيد عن التشعب الرئيسي الأول ((M2في حوالي 40٪ من الحالات [7، 9، 11، 12].

إن تدبير أمهات الدم الدماغية عند الأطفال أمر مثير للجدل.

تستند الأدلة الخاصة بإدارة أمهات الدم الدماغية لدى الأطفال إلى حد كبير على الخبرة في المرضى البالغين وسلسلة الحالات المبلغ عنها. [13]

فريق متعدد التخصصات يتألف من أطباء الأعصاب في السكتة الدماغية وجراحي الأعصاب الوعائية الدماغية وأخصائيي الأشعة العصبية التداخلية هو الأفضل في علاج تمدد الأوعية الدموية المعقدة داخل الجمجمة وتحقيق النتائج المثلى. [14] تشمل خيارات العلاج المراقبة أو العلاج داخل الأوعية الدموية أو الربط الجراحي.

عرض الحالة:

قدم طفل يبلغ من العمر 10 سنوات إلى قسم الطوارئ شاكياً من صداع شديد وشفع وتدلي جزئي للجفن.

عند الدخول كان الطفل واسنا، غلاسكو 14، 130/85 BP مم زئبق، نبض 68 / دقيقة، تنفس 16 / دقيقة. كان النعاس يسيطر على حالته العصبية، الحدقات مختلفة بالاتساع وتفاعل الضياء طبيعي. تتحول العين اليسرى قليلاً إلى الخارج وإلى الأسفل عندما تنظر العين اليمنى إلى الأمام بشكل مستقيم. كانت العلامات السحائية سلبية. كانت بقية نتائج الفحص طبيعية.

تم إدخال المريض إلى وحدة العناية المركزة للأطفال لمراقبة ارتفاع التوتر داخل القحف.

تم إجراء فحص عاجل بالأشعة المقطعية للدماغ ولم يظهر نزيف داخل الجمجمة أو آفات أخرى في الجهاز العصبي المركزي.

تم إجراء التصوير بالرنين المغناطيسي للدماغ أيضًا لاستبعاد أي حالة غير طبيعية في الدماغ مثل الخراجات والأورام والنزيف والتورم والتشوهات التنموية والهيكلية والالتهابات والحالات الالتهابية أو مشاكل الأوعية الدموية. أظهرت نتائج طبيعية.

تم إجراء الفحوصات السريرية والفحوصات المخبرية القياسية لاستبعاد الإنتان الدماغي والسموم والأمراض الاستقلابية.

كشف تصوير الأوعية المقطعي المحوسب (الشكل 1) عن أم دم دماغية بالشكل الكيسي 5 مم على الجانب الأيسر من تفرع ICA.

توفي والده بسبب الفشل الكلوي بسبب مرض الكلى المتعدد الكيسات.

يُظهر فحص البطن بالموجات فوق الصوتية عدم وجود موه الكلية أو عيوب ملء أو أكياس في كلتا الكليتين.

كانت مراجعة المريض للأنظمة والتاريخ الطبي الإضافي الجراحي والأسري والنفسي الاجتماعي والصيدلاني غير ملحوظة.

تم إجراء فحص تفصيلي وتصوير لاستبعاد أي حالات مرتبطة، مثل مرض الكلى المتعدد الكيسات السائد ((ADPKD، وخلل التنسج العضلي الليفي، وتضيق الأبهر، ومتلازمة إهلرز، ومتلازمة مارفانس.

تم عقد اجتماع لفريق متعدد التخصصات ((MDTوأوصى بإجراء الجراحة بعد قرار متعدد التخصصات مع أخصائي الأشعة واثنين من جراحي الأعصاب.

تم إجراء الجراحة من خلال نهج حج القحف pterional الممتد.

يتم تحديد ICA supraclinoid ويستمر التشريح على طول ICA إلى التشعب والجوانب السفلية من M1 لكشف تشعب الشريان السباتي من خلال الطرف الأفقي للشق. كشفت الأجزاء القريبة M1 و1A.

تم استخدام مشبك بزاوية طفيفة لإغلاق عنق أم الدم. بمجرد وضع شفرات الكليب CLIPفي مكانها حول عنق أم الدم، يتم تقريب الشفرات بلطف بينما يتم تجنب أي رض على الأوعية الدموية

أظهر CTA بعد الإجراء اختفاء أم الدم الدماغية (الشكل 2). ظل المريض تحت المراقبة لمدة 3 أيام في وحدة العناية المركزة العصبية. لم تكن هناك مضاعفات حول أو بعد العملية وخرج المريض في اليوم 7 بعد العملية. أظهرت المتابعة السريرية للطفل بعد شهر نتائج طبيعية. في متابعة لمدة 6 أشهر، كان الفحص العصبي طبيعيًا.

مناقشة:

فقط 0.5٪ إلى 4.6٪ من جميع حالات أمهات الدم الدماغية تحدث في المرضى الذين تبلغ أعمارهم 18 عامًا أو أقل، مما يجعلها مرضًا غير شائع في معظم مراكز طب الأطفال. [12،15]

يتناقص معدل حدوث أمهات الدم الدماغية عند الأطفال مع تقدم العمر. تبلغ نسبة أمهات الدم الدماغية المتمزقة في المرضى الذين تقل أعمارهم عن 20 عامًا حوالي 3.5٪ ونسبة أمهات الدم الدماغية الممزقة في المرضى الذين تقل أعمارهم عن 15 عامًا أقل من 1٪ [6].

بالنسبة لأولئك الشباب الذين يعانون من أمهات الدم الدماغية غير الممزقة والتي تظهر في البداية مع الصداع المعمم أو حتى النوبات الاختلاجية، قد لايظهر الفحص بالأشعة المقطعية بعد الحقن الآفة المسببة. من الجدير بالذكر أنه تم الإبلاغ عن حالات الصداع والنوبات الاختلاجية غير المرتبطة بالنزيف تحت العنكبوتية لتكون من الأعراض الحالية لأمهات الدم الدماغية لدى الأطفال بنسبة تصل إلى 40٪ من الوقت. [16،17]

من غير المحتمل أن تساهم عوامل الخطر الراسخة للبالغين مثل الكحول وارتفاع ضغط الدم والتدخين في تلك الموجودة في مجتمع الأطفال. من المحتمل أن يكون حدوث أمهات الدم الدماغية نتيجة للتفاعل بين العوامل الخلقية (التغيرات في جدار الوعاء الدموي) والضغط الديناميكي الدموي [18].

ليبر وآخرون. [19] اقترح أن عيبًا خلقيًا وسطيًا كبيرًا يمكن أن يكون العامل البادئ لأمهات الدم الدماغية الذي يحدث في وقت مبكر من الحياة. ارتبطت بعض الاضطرابات الضامة الموروثة بتمدد الأوعية الدموية الدماغية: متلازمة مارفان، متلازمة إهلرز دانلوس، الورم العصبي الليفي ومرض الكلى المتعدد الكيسات السائد.

ذكر أن التغيير الفيزيولوجي المرضي الباطني بواسطة قوى الدورة الدموية يحدث عادة عند التشعبات الشريانية [20]. وقد ثبت أن الضغط الكبير الناتج عن ضغط الدم النابض أدى إلى إجهاد هيكلي في جدار الشرايين وأدى إلى تخرب الصفيحة المرنة الداخلية [21]. يتضح دور العوامل الهيموديناميكية من خلال غلبة أمهات الدم الدماغية بالتشعب ICAإلى 50٪ و2.1٪ فقط عند البالغين [7،9،22].

في هذه الحالة، لم تكن هناك عوامل مؤهبة لأمهات الدم الدماغية، مثل مرض النسيج الضام المعروف أو مرض الكلى المتعدد الكيسات، ولا توجد رضوض سابقة.

يُظهر فحص البطن بالموجات فوق الصوتية عدم وجود موه الكلية أو عيوب ملء أو أكياس في كلتا الكليتين.

تم إجراء فحص تفصيلي وتصوير لاستبعاد أي حالات مرتبطة، مثل مرض الكلى المتعدد الكيسات السائد ((ADPKD، وخلل التنسج العضلي الليفي، وتضيق الأبهر، ومتلازمة إهلرز، ومتلازمة مارفانس.

قد تكون هناك حاجة لمزيد من الدراسات الجينية لإظهار نسبة حدوث تمدد أمهات الدم الدماغية في مرضى أسر ADPKD مع فرد واحد على الأقل من أفراد الأسرة المتضررين.

إن تدبير أمهات الدم الدماغية غير الممزقة أمر مثير للجدل [23].

لا توجد تجارب عشوائية يمكن بناء التوصيات عليها. تحتاج القرارات المتعلقة بالعلاج إلى الموازنة بين التاريخ الطبيعي لأمهات الدم الدماغية ومخاطر التدخل وتفضيلات المريض. بينما تتم مناقشة هذه التفاصيل بالتفصيل، بشكل عام، فإن أمهات الدم الدماغية بدون أعراض بقطر 7 إلى 10 ملم يتطلب دراسة قوية للعلاج، مع الأخذ في الاعتبار عمر المريض، والحالات الطبية والعصبية الموجودة، والمخاطر النسبية للعلاج [24].

قد لا يؤدي العلاج داخل الأوعية الدموية باستخدام اللفائف أو اللف من خلال الدعامة إلى انسداد أمهات الدم الدماغية مدى الحياة. علاوة على ذلك، يصعب إجراء عمليات الأوعية الدموية الداخلية عند الأطفال الصغار [25]

وبالمثل، [26] .Sanai et alقام ببناء حالة قوية للعلاج الجراحي حيث لاحظوا معدل تكرار أعلى في أمهات الدم الدماغية المعالجة من داخل الأوعية إلى جانب معدل أعلى لتكوين أمهات الدم الدماغية في الأطفال.

كان العلاج الجراحي لأمهات الدم الدماغية غير المتمزقة هو الإجراء الأكثر شيوعًا في المرضى الذين يخضعون لعلاج نهائي دائم.

يجب علاج أمهات الدم الدماغية العرضي مبكرًا لأن فرص التمزق أعلى بسبب زيادة فترة الخطر لدى مرضى الأطفال. نسبة حدوث SAH بسبب وجود أمهات الدم الدماغية غير الممزقة الموجودة سابقًا في شخص يبلغ من العمر 20 عامًا هي 16.6 ٪ وفقًا لإحدى الدراسات [27]. في سلسلة Weibers، كانت نسبة حدوث التمزق 11.5٪. [28] في حالتنا، قررنا تدبير أمهات الدم الدماغية عن طريق القطع الجراحي اعتمادًا على المعايير المذكورة أعلاه ولأنها أم دم دماغية عرضية.

الحاجة إلى التحدث المستمر والفعال بين الأطباء وأخصائيي الأشعة العصبية التشخيصية للأطفال لضمان إدارة سريرية آمنة ومناسبة لمرضى الأطفال. [29]

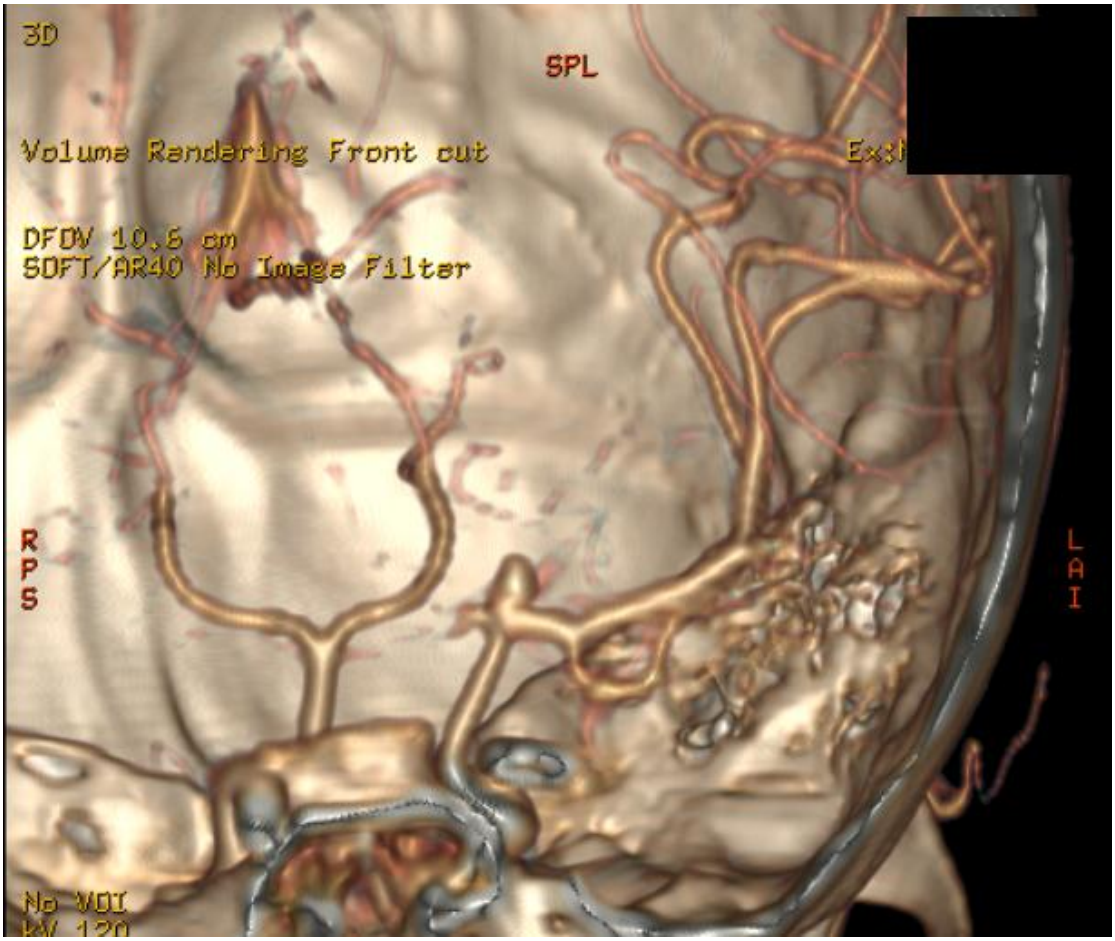
حالات أمهات الدم الدماغية غير المتمزقة عند الأطفال أقل من 1٪، لذا فإن الحكمة في اتخاذ القرار الإداري تلعب دورًا حاسمًا.

يوصى بمزيد من أدوات التدريب التي تتضمن محاكاة التمثيل الكامل 3D لتطوير منحنى تعليمي موحد في إجراءات الأوعية الدموية العصبية. [30]

الاستنتاجات والتوصيات

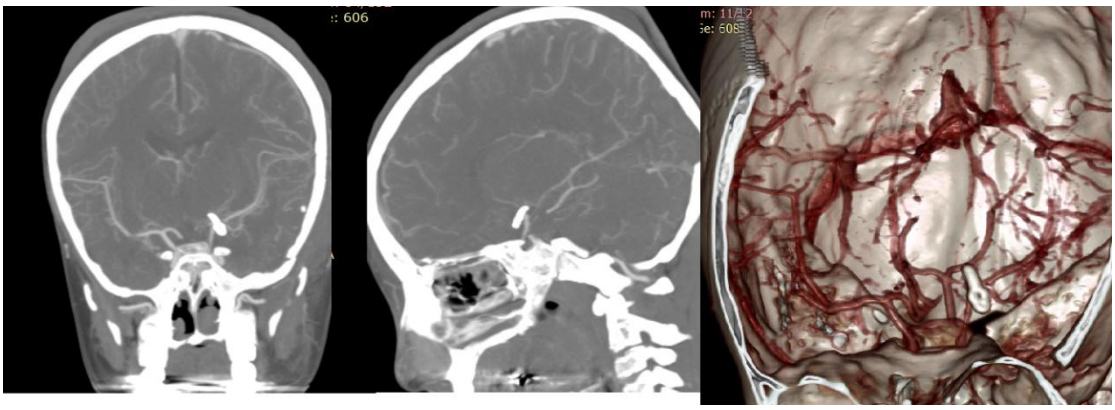
يعد تشخيص أمهات الدم الدماغية غير المتمزقة المصحوب بأعراض أمرًا صعبًا. يتمثل التحدي التالي في تحديد أي أمهات الدم الدماغية التي تشكل خطرًا كبيرًا على حدوث تمزق في المستقبل.

إن تدبير أمهات الدم الدماغية عند الأطفال أمر مثير للجدل. الفريق متعدد التخصصات هو الأفضل في علاج مثل هذه الحالات المعقدة.



الصورة 1: طبقي محوري وعائي يظهر أم دم على تفرع السباتي الباطن الأيسر

الصورة 2:



Enhanced CT angiography A: Coronal, B: Sagittal, C: 3D-CT simulation image: Post clip CT angiogram shows no residual aneurysm.

طبقي محوري وعائي يظهر ال Clip واختفاء ام الدم

References

1. Meyer FB, Sundt TM Jr, Fode NC, Morgan MK, Forbes GS, Mellinger JF (1989) Cerebral aneurysms in childhood and adolescence. J Neurosurg 70: 420–425
2. . Proust F, Toussaint P, Garnieri J, Hannequin D, Legars D, Houtteville JP, Freger P (2001) Pediatric cerebral aneurysms. J Neurosurg 94: 733–739
3. Wojtacha M, Bazowski P, Mandera M, Krawczyk I, Rudnik A (2001) Cerebral aneurysms in childhood. Childs Nerv Syst 17: 37–41
4. Sorteberg A, Dahlberg D. Intracranial non-traumatic aneurysms in children and adolescents. Curr Pediatr Rev 2013; 9:343–52.
5. Raps EC, Rogers JD, Galetta SL, et al. The clinical spectrum of unruptured intracranial aneurysms. Arch Neurol 1993; 50:265–268
6. Pasqualin A, Mazza C, Cavazzani P. Intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage in children and adolescents. Child's Nerv Syst 1986; 2:185-190.
7. Gerosa M, Licata C, Fiore D, Iraci G. Intracranial aneurysms of childhood. Child's Brain 1980; 6:295-302.
8. Lena G, Choux M. Giant intracranial aneurysms in children 15 years older or under: case reports and literature review. J Pediatric Neurosci 1985; 1:84-93.
9. Ostergaard JR, Voldby B. Intracranial arterial aneurysms in children and adolescents. J Neurosurg 1983; 58:832-837.
10. Almeida G, Plese JPP, Bianco E, Shibata MK. Intracranial arterial aneurysms in infancy and childhood. Child's Brain 1977; 3:193-199.
11. Storrs BB, Humphreys RP, Hendrick EB. Intracranial aneurysms in the pediatric age-group. Child's Brain 1982;9: 358-361.
12. Rinkel GJ, Djibuti M, Algra A, van Gijn J: Prevalence and risk of rupture of intracranial aneurysms: a systematic review. Stroke 29:251–256, 1998
13. Bhogal P, Pérez MA, Wendl C, et al. Paediatric aneurysms - Review of endovascular treatment strategies. J Clin Neurosci 2017; 45:54–9
14. Johnston SC. Effect of endovascular services and hospital volume on cerebral aneurysm treatment outcomes. Stroke 2000;31(1):111–7
15. Jian BJ, Hetts SW, Lawton MT, Gupta N: Pediatric intracranial aneurysms. Neurosurg Clin N Am 21:491–501, 2010
16. HuangJ, McGirt M J, Gailloud P, e t al. Intracranial aneurysms in the pediatric population: case series and literature review. Surg Neurol 2005;6 3 (5): 4 2 4 – 3 2 [discussion: 4 3 2 – 3].
17. Hetts SW, Narvid J, Sanai N, et al. Intracranial aneurysms in childhood: 27-year single-institution experience. AJNR Am J Neuroradiol 2009;30(7):1315–24.
18. Sekhar L, Heros R. Origin, growth and rupture of saccular aneurysms: a review. Neurosurgery 1981; 8:248-260.
19. Lipper S, Morgan D, Krigman MR. Congenital saccular aneurysm in a 19-day-old neonate: case report and review of the literature. Surg Neuro l 1978;10:161-165
20. Ferguson GG. Physical factors in the initiation, growth, and rupture of human intracranial saccular aneurysms. J Neuro surg 1972; 37:666-667.
21. . Roach MR. A model study of why some intracranial aneurysms thrombose but others rupture. Stroke 1978; 9:583-587.

22. Locksley HB. Report on the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. Section V, part 1: Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformations. Based on 6,368 cases in the cooperative study. J Neurosurg 1966;25: 219-239.
23. Johnston SC, Wilson CB, Halbach VV, et al. Endovascular and surgical treatment of unruptured cerebral aneurysms: comparison of risks. Ann Neurol 2000; 48:1 1
24. Greving JP, Rinkel GJ, Buskens E, Algra A. Cost-effectiveness of preventive treatment of intracranial aneurysms: new data and uncertainties. Neurology 2009; 73:258.
25. Dell S. Asymptomatic cerebral aneurysm: assessment of its risk of rupture. Neurosurgery 1982; 10:162-6.
26. Sorteberg A, Dahlberg D. Intracranial Non-Traumatic Aneurysms in Children and Adolescents. Curr Pediatr Rev. 2013 Nov;9(4):343-352.
27. Sanai N, Quinones-Hinojosa A, Gupta NM, et al. Pediatric intracranial aneurysms: durability of treatment following mi-crosurgical and endovascular management. J Neurosurg. 2006;104(2 Suppl):82–9.
28. Weibers DO, Whisnant JP, Sundt TM. The significance of Unruptured intracranial saccular aneurysms. J Neurosurg 1987; 66:23-9.
29. Ganau M, Magdum SA, Calisto A. Pre-operative imaging and post-operative appearance of standard paediatric neurosurgical approaches: a training guide for neuroradiologists. Transl Pediatr. 2021 Apr;10(4):1231-1243.
30. Zaed I, Chibbaro S, Ganau M, Tinterri B, Bossi B, Peschillo S, Capo G, Costa F, Cardia A, Cannizzaro D. Simulation and virtual reality in intracranial aneurysms neurosurgical training: a systematic review. J Neurosurg Sci. 2022 Mar 17.